

Anquiloglosia (frenillo lingual corto): sugerencias para el diagnóstico y el manejo clínico

José Luis Cuervo

Introducción

La anquiloglosia, también conocida como frenillo lingual corto, es una anomalía congénita del desarrollo lingual, caracterizada por la presencia de una membrana anormal que ancla la zona media de la cara inferior de la punta de la lengua al piso de la boca, en una extensión variable; este defecto puede reducir, en diversos grados, la motilidad lingual.

El propósito de este trabajo es describir la entidad, sus probables implicancias clínicas, y realizar sugerencias para su manejo práctico.

Etiopatogenia

La etiopatogenia de esta anomalía es desconocida, y los libros de embriología no brindan luces sobre el tema. Se han comunicado antecedentes familiares positivos en el 21% de los niños con esta patología.^{1,2}

En el ser humano normal, el frenillo lingual se presenta como un fino engrosamiento epitelial medio que se extiende desde la cara inferior de la punta de la lengua hasta casi el reborde gingival inferior. La presencia de anquiloglosia sugiere una incompleta separación entre los epitelios de la cara inferior de la punta de la lengua y del piso de la boca. En sentido estricto, el frenillo no es corto, sino que es "anómalo y largo". Aunque en los primeros años de vida es una membrana delgada y transparente, con los años, se torna blanquecina y gruesa.

Epidemiología

La prevalencia de este defecto es del 4-10% en recién nacidos normales;¹⁻⁴ es más común en los varones, en una proporción de 3 a 1.^{2,4,5} Si bien puede ser parte de un síndrome malformativo (síndromes de Opitz, Simosa, Beckwith-Wiedemann, Simpson-Golabi-Behmel, orofaciodigital y paladar hendido ligado al cromosoma X),⁶⁻¹² la mayoría de las veces es un hallazgo aislado en un niño sano.

Generalidades

La lengua es una estructura oral muy importante que influye sobre la nutrición, el lenguaje, la posición de los dientes, la higiene bucal, el desarrollo óseo del maxilar superior e inferior y sobre ciertas actividades mecánicas, como higienizarse los dientes, lamerse los labios, degustar un helado, tocar un instrumento de viento o besar. La anquiloglosia limita el rango de motilidad lingual, lo que disminuye su capacidad de cumplir a pleno sus funciones.¹³⁻¹⁵

La definición, las implicancias clínicas, la necesidad de tratamiento quirúrgico y el momento adecuado para efectuarlo siguen siendo motivo de controversia;^{2,16,17} el grupo de pediatras es el más reacio a recomendar la corrección quirúrgica.¹⁷

Definición

A pesar de ser una patología frecuente, no existe un criterio único para diagnosticarla en un niño.^{3,18,19} El criterio más comúnmente aceptado es la simple presencia de una membrana anormal entre la cara inferior de la punta de la lengua y el piso de la boca, que produce una muesca en corazón, sobre el borde lingual anterior (Figura 1). Sin embargo, algunos autores^{17,20-24} exigen la presencia concomitante de limitaciones funcionales, como la imposibilidad de protruir la lengua más allá de la línea gingival inferior. Este último criterio es el adoptado en este trabajo.

También se ha ideado un sistema de puntajes²⁵ que utiliza parámetros de apariencia y de funcionalidad para determinar si hay anquiloglosia y su grado de severidad. A pesar de su mayor objetividad, este sistema es demasiado largo y complejo para ser usado en la práctica diaria.

Asimismo, es motivo de controversia cuál es la extensión de la anquiloglosia que provoca síntomas clínicos y determina la necesidad de tratamiento.²⁶ Los posibles problemas asociados con esta entidad están relacionados con las limita-

Unidad 12 -
Cirugía
Hospital de Niños
"Ricardo Gutiérrez"
Gallo 1330 (1425)
Buenos Aires,
Argentina

Figura 1.
Frenillo lingual
corto.



ciones que ocasiona sobre la motilidad lingual, e incluyen dificultades en la alimentación a pecho, trastornos del lenguaje, las limitaciones mecánicas antes mencionadas y cierta sensación de turbación o complejo social.^{20,21,23,27-31}

Mientras que unos pocos piensan que raramente es sintomática,³²⁻³⁴ la mayoría sostiene que puede ocasionar un gran número de problemas.^{2-4,18,20-23,27,31,35-47}

Dificultades en la alimentación a pecho

El efecto de la anquiloglosia sobre la alimentación a pecho es motivo de controversia desde hace más de 50 años.^{21,48-50} El 25-60% de los casos se asocia con lesión y dolor de pezones, succión pobre, disminución de la salida de leche por la mama, falta de engullimiento, rechazo de la alimentación a pecho y falta de aumento de peso.^{2-4,18,20-23,35-37,40-44,46}

La prevalencia de dolor en madres que amamantan a lactantes con frenillo corto es mucho más alta que en aquellas madres que alimentan a niños normales, y representa un problema considerable en términos de interrupción de la lactancia, ya que por cada día de dolor durante las primeras tres semanas de lactancia, el riesgo de cese de este tipo de alimentación es del 10-26%.⁵¹ La prevalencia de dolor de pezón es del 60% al 80% en todas las madres que amamantan durante el período posparto inicial.^{46,52,53} Cuando los niños son normales, este dolor es transitorio, alcanza el pico máximo al tercer día, y desaparece espontáneamente dentro de las siguientes dos semanas.⁵² Sólo un 3% de las madres de niños normales tienen dolor intratable o dificultades para lograr que sus bebés se adhieran al pezón a las 6 semanas, pero el 25% de las madres de niños con anquiloglosia tiene dichos problemas.⁴

Se postula que los lactantes con anquiloglosia restrictiva no pueden extender su lengua más allá del reborde gingival inferior para estimular el vaciado de los conductos lactíferos y lograr un cierre efectivo de la boca contra el seno materno, y deben usar sus mandíbulas para mantener el pecho en la boca.^{2,3,20,23,54} Esto se traduciría en pobre estímulo peristáltico, adhesión inefectiva y lesión de los pezones. Dada su naturaleza estructural, el asesoramiento con técnicas de posicionamiento y adhesión, a menudo es ineficaz.^{20,55}

Teniendo en cuenta estos problemas, la frenotomía podría ser de gran utilidad *en niños con anquiloglosia y trastornos de amamantamiento*. Existen numerosos trabajos que muestran una mejoría clínica significativa en lactantes con frenillo corto luego de la frenotomía.^{2,3,20-23,35-37,40-45,55,56}

Una revisión reciente del tema publicada bajo los auspicios del Comité sobre amamantamiento de la Academia Americana de Pediatría, concluyó que la frenotomía es un procedimiento seguro y eficaz para reducir al mínimo las dificultades en el amamantamiento originadas a partir de un frenillo lingual corto.⁵⁷ Sin embargo, existen trabajos que no encuentran cabida para la cirugía durante la etapa neonatal.²⁷

Para graficar ambas posiciones extremas, una encuesta¹⁷ reveló que el 90% de los pediatras consultados piensa que la anquiloglosia raramente causa trastornos en el amamantamiento y, por lo tanto, son reacios a indicar cirugía en esta etapa y por este motivo; en tanto, el 99% de los especialistas en lactancia cree que frecuentemente u ocasionalmente causa problemas en la lactancia y consideran que la frenotomía neonatal es muy útil.

Dado que se tiende a considerar esta patología como muy banal, es posible que los pediatras tengan una visión superficial sobre el tema.

Trastornos del lenguaje

El efecto de la anquiloglosia sobre el lenguaje también es motivo de controversia. Aunque no siempre hay trastornos del lenguaje, históricamente se los ha considerado el principal problema asociado a anquiloglosia. En un trabajo-encuesta, el 71% de los niños con esta disfunción tenía problemas en la articulación de la palabra, el 60% de ellos mejoró luego de cirugía.³⁹ En el trabajo-encuesta antes mencionado,¹⁷ el 77% de los pediatras sostiene que la anquiloglosia nunca o raramente se asocia con problemas del lenguaje, mientras que el 50% de los especialistas en el tema sostiene que se asocia a dicha patología, y creen que la cirugía es beneficiosa en tales casos.

Limitaciones mecánicas

A pesar de que casi toda la bibliografía sobre el tema está referida a lactantes y niños, datos aislados sugieren que la anquiloglosia puede estar asociada a limitaciones mecánicas o a cierta sensación de inquietud sobre la pronunciación de las palabras.^{21,27,31,47}

Resultan muy interesantes las observaciones realizadas en un estudio prospectivo de 15 individuos de entre 14 y 68 años con anquiloglosia.³⁸ Casi todos los pacientes (93%) presentaban síntomas, como problemas en la articulación de la palabra o limitaciones mecánicas, y se observó mejoría significativa en la funcionalidad lingual luego de la cirugía. Aun así, los datos pueden estar subestimados, ya que los pacientes que nunca experimentaron una amplia motilidad lingual por su anquiloglosia, pueden no estar totalmente conscientes de sus limitaciones. Aunque la articulación de la palabra era groseramente normal en todos los sujetos estudiados, el 50% tenía preocupaciones subjetivas respecto de su lenguaje.

Nuevamente aquí surge la distinta percepción del problema por parte de la comunidad médica tratante, pues mientras dos tercios de los otorrinolaringólogos consultados creen que estos problemas pueden asociarse con anquiloglosia, sólo el 21% de los pediatras comparte esa opinión.¹⁷

Conducta

Existen notables diferencias de opinión entre los distintos especialistas médicos involucrados en cuanto a indicación de cirugía, momento más oportuno y técnica quirúrgica. La mayo-

ría de los pediatras cree que la anquiloglosia no requiere terapia, ya sea porque se puede resolver en forma espontánea, o porque en la mayoría de los niños es asintomática o porque los niños afectados pueden aprender a compensar adecuadamente su motilidad lingual disminuida.³²

En sentido amplio, un pediatra podría optar entre indicar cirugía siempre, o sólo si surgen problemas en la lactancia, o antes de que surjan problemas en el lenguaje, o si aparecen problemas en el lenguaje, o si surgen problemas en el lenguaje no solucionables con terapia educativa, o si aparecen impedimentos para realizar algunos actos mecánicos, o nunca.

Los datos objetivos sugieren:

1. Dado que se trata de una anomalía estructural, "*nunca desaparece sola*" y siempre persiste en el tiempo.
2. La gran mayoría de los niños y adultos afectados son sintomáticos.^{2-4,18,20-23,27,31,35-47}

Si se tienen en cuenta estos datos y se toma como definición de anquiloglosia la presencia de una membrana anómala que impide protruir la lengua más allá de la línea gingival inferior, se podría sugerir lo siguiente:

1. Si el paciente presenta dificultades serias en el amamantamiento, es prudente realizar la corrección quirúrgica en etapa neonatal.^{2-4,18,20-23,35-37,40-46,54-57}
2. Si el paciente no tiene tales dificultades y se quiere evitar cualquier posibilidad de alteración futura en la articulación de la palabra, es prudente realizar la corrección quirúrgica antes de que el niño comience a hablar, pues los resultados no son tan buenos una vez que se ha establecido la deformación del lenguaje.^{22,40,42}
3. Si se optó por no operar y el paciente tiene trastornos del lenguaje o limitaciones mecánicas, es prudente indicar la cirugía en dicho momento.^{27,28,31,58,59}

Los padres deben ser asesorados acerca de los posibles efectos a largo plazo del frenillo lingual corto y de las implicancias de la cirugía, a fin de que puedan realizar una elección informada sobre las distintas alternativas terapéuticas.

Las posibles opciones quirúrgicas son la simple sección del frenillo lingual (frenotomía) o la sección del frenillo lingual complementada con algún tipo de plástica de la superficie cruenta (frenuloplastia), de tipo transversal-longitudinal o zetaplastia (Figura 2).

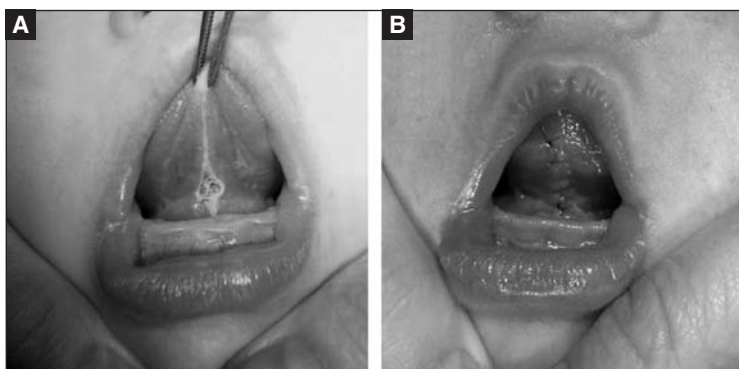


Figura 2. A, frenotomía; B, frenuloplastia de tipo transversal-longitudinal.

En niños <4 meses, el procedimiento puede practicarse sin anestesia general y suele consistir en una simple frenotomía;^{3,20,60,61} en niños mayores, el procedimiento se realiza con anestesia general y puede optarse entre frenotomía² y frenuloplastia.⁶² Tanto la literatura como la experiencia personal indican que esta última reduce el riesgo de recurrencia comparada con la frenotomía,⁶³ al disminuir la formación de adherencias y de tejido cicatrizal. Las complicaciones publicadas son escasas e incluyen hemorragia y recurrencia.^{20,35,37,60,64,65} En la actualidad, éstas son insignificantes^{18,55,56} y, en ninguno de los trabajos publicados, se observó complicación seria asociada a la cirugía.^{2,17,20-23,55,56}

Quizás, la complicación más frecuente sea la recidiva o la falta de mejoría evidente de la anomalía, secundaria a cicatrización excesiva (2-14% de los pacientes operados), y es menos severa que el cuadro original.¹⁷

Evaluación de los resultados

Se han ideado sistemas de puntajes que evalúan función y apariencia de la lengua antes y después de la operación.²⁵ También hay trabajos que evalúan en milímetros la protrusión de la punta de la lengua y su separación del piso de la boca antes y después de la operación.^{64,66} Otros evalúan mejoras en los trastornos de alimentación, dicción o mecánicos, por los que la cirugía fue indicada.^{16,25,38,39}

Siguiendo los datos aportados por el trabajo-encuesta, los resultados obtenidos varían ampliamente, y los pediatras fueron el grupo que encontró peores resultados (poca eficacia de la cirugía para solucionar el problema por el que fue indicada).

En síntesis, pese a ser una malformación frecuente, llama la atención la tendencia a no reconocerla como una anomalía evidente y, por lo tanto, a no buscar la solución adecuada.

Los datos bibliográficos disponibles sugieren que la anquiloglosia es un problema común, que causa trastornos y puede ser corregida sencillamente con cirugía.

Bibliografía

1. Klockars T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007;71(8):1321-1324 (E-pub, junio 22, 2007).
2. Ballard JL, Auer CE, Khoury JC. Ankyloglossia: assessment, incidence, and effect of frenuloplasty on the breastfeeding dyad. *Pediatrics* 2002;110(5):e63.
3. Segal LM, Stephenson R, Dawes M, et al. Prevalence, diagnosis, and treatment of ankyloglossia: methodologic review. *Can Fam Physician* 2007;53(6):1027-1033.
4. Messner AH, Lalakea ML, Aby J, et al. Ankyloglossia: incidence and associated feeding difficulties. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2000;126:36-39.
5. Friend GW, Harris EF, Mincer HH, et al. Oral anomalies in the neonate, by race and gender, in an urban setting. *Pediatr Dent* 1990;12:157-161.
6. Patterson GT, Ramasastry SS, Davis JU. Macroglossia and ankyloglossia in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988;65:29-31.
7. Suri M, Kabra M, Verma IC. Blepharophimosis, telecanthus, microstomia, and unusual ear anomaly (Simosa syndrome) in an infant. *Am J Med Genet* 1994;51:222-223.
8. Gorski SM, Adams KJ, Birch PH, et al. The gene responsible for X-linked cleft palate (CPX) in a British Columbia native kindred is localized between PGK1 and DXYS1. *Am J Hum Genet* 1992;50:1129-1136.
9. Hughes-Benzie RM, Hunter AG, Allanson JE, et al. Simpson-Golabi-Behmel syndrome associated with renal dysplasia and embryonal tumor: localization of the gene to Xqcen-q21. *Am J Med Genet* 1992;43:428-435.
10. Emmanouil-Nikoloussi E, Kerameos-Foroglou C. Congenital syndromes connected with tongue malformations. *Bull Assoc Anat (Nancy)* 1992;76:67-72.
11. Gunbay S, Zeytinoglu B, Ozkinay F, et al. Orofaciodigital syndrome I: a case report. *J Clin Pediatr Dent* 1996;20:329-332.
12. Martinot VL, Manouvrier S, Anastassov Y, et al. Orodigitofacial syndromes type I and II: clinical and surgical studies. *Cleft Palate Craniofac J* 1994;31:401-408.
13. Sanchez-Ruiz I, Gonzalez Landa G, Perez Gonzalez V, et al. Section of the sublingual frenulum. Are the indications correct? [in Spanish]. *Cir Pediatr* 1999;12:161-164.
14. Hasan N. Tongue tie as a cause of deformity of lower central incisor. *J Pediatr Surg* 1973;8:985.
15. Defabianis P. Ankyloglossia and its influence on maxillary and mandibular development. (A seven year follow-up case report). *Funct Orthod* 2000;17(4):25-33.
16. Lalakea ML, Messner AH. Ankyloglossia: does it matter? *Pediatr Clin North Am* 2003;50(2):381-397.
17. Messner AH, Lalakea ML. Ankyloglossia: controversies in management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2000;54:123-131.
18. Ricke L, Baker N, Madlon-Kay D, et al. Newborn tongue-tie: prevalence and effect on breast-feeding. *J Am Board Fam Pract* 2005;18(1):1-7.
19. Community Paediatrics Committee. Ankyloglossia and breastfeeding. *Paediatr Child Health* 2002;7(4):269-270.
20. Marmet C, Shell E, Marmet R. Neonatal frenotomy may be necessary to correct breastfeeding problems. *J Hum Lact* 1990;6:117-121.

21. Fleiss PM, Burger M, Ramkumar H, et al. Ankyloglossia: a cause of breastfeeding problems? *J Hum Lact* 1990;6:128-129.
22. Notestine GE. The importance of the identification of ankyloglossia (short lingual frenulum) as a cause of breastfeeding problems. *J Hum Lact* 1990;6:113-115.
23. Masaitis N, Kaempff J. Developing a frenotomy policy at one medical center: a case study approach. *J Hum Lact* 1996;12(3):229-232.
24. Jorgenson R, Shapiro S, Salinas C, et al. Intraoral findings and anomalies in neonates. *Pediatrics* 1982;69(5):577-582.
25. Hazelbaker AK. The Assessment Tool for Lingual Frenulum Function (ATLFF): Use in a Lactation Consultant Private Practice. Pasadena, CA: Pacific Oaks College; 1993.
26. Ruffoli R, Giambelluca MA, Scavuzzo MC, et al. Ankyloglossia: a morphofunctional investigation in children. *Oral Dis* 2005;11(3):170-174.
27. Wright JE. Tongue-tie. *J Paediatr Child Health* 1995;31:276-278.
28. Horton CE, Crawford HH, Adamson JE, et al. Tongue-tie. *Cleft Palate J* 1969;6:8-23.
29. Fletcher SG, Meldrum JR: Lingual function and relative length of the lingual frenulum. *J Speech Hearing Res* 1968;2:382-390.
30. Ketty N, Sciuolo PA. Ankyloglossia with psychological implications. *J Dent Child* 1974;41(1):43-46.
31. Wallace AF. Tongue-tie. *Lancet* 1963;2:377-378.
32. Ulshen M. Clinical manifestations of gastrointestinal disease; normal digestive tract phenomena. En: Behrman ER, Kliegman RM, Jenson HB (eds.) *Nelson Textbook of Pediatrics* 16th ed. Philadelphia: WB Saunders Co; 2000:1101-1102.
33. McEnery ET, Gaines FP: Tongue-tie in infants and children. *J Pediatr* 1941;18:252-255.
34. Paradise JL. Evaluation and treatment for ankyloglossia. *JAMA* 1990;262:2371.
35. Srinivasan A, Dobrich C, Mitnick H, et al. Ankyloglossia in breastfeeding infants: the effect of frenotomy on maternal nipple pain and latch. *Breastfeed Med* 2006;1(4):216-224.
36. Wallace H, Clarke S. Tongue tie division in infants with breast feeding difficulties. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2006;70(7):1257-1261 (E-pub, marzo 9, 2006).
37. Dollberg S, Botzer E, Grunis E, et al. Immediate nipple pain relief after frenotomy in breast-fed infants with ankyloglossia: a randomized, prospective study. *J Pediatr Surg* 2006;41(9):1598-1600.
38. Lalakea ML, Messner AH. Ankyloglossia: the adolescent and adult perspective. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;128(5):746-752.
39. Messner AH, Lalakea ML. The effect of ankyloglossia on speech in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;127(6):539-545.
40. Nicholson WL. Tongue-tie (ankyloglossia) associated with breastfeeding problems. *J Hum Lact* 1991;7:82-84.
41. Berg KL. Two cases of tongue-tie and breastfeeding. *J Hum Lact* 1990;6:124-126.
42. Berg KL. Tongue-tie (ankyloglossia) and breastfeeding: a review. *J Hum Lact* 1990;6:109-112.
43. Wilton JM. Sore nipples and slow weight gain related to a short frenulum. *J Hum Lact* 1990;6:122-123.
44. Hingley G. Ankyloglossia clipping and breast feeding. *J Hum Lact* 1990;6:103.
45. Velanovich V. The transverse-vertical frenuloplasty for ankyloglossia. *Mil Med* 1994;159:714-715.
46. Tait P. Nipple pain in breastfeeding women: causes, treatment, and prevention strategies. *J Midwifery Womens Health* 2000;45(3):212-215.
47. Kotlow LA. Ankyloglossia (tongue-tie): A diagnostic and treatment quandary. *Quint Int* 1999;30:259-262.
48. Jain E. Tongue-tie: its impact on breastfeeding. *AARN News Lett* 1995;51:18.
49. Huggins K. Ankyloglossia: one lactation consultant's personal experience. *J Hum Lact* 1990;6:123-124.
50. Deports J, Parkhurst E. Congenital malformations and birth injuries among the children born in New York State, outside of New York City, in 1940-1942. *NY State J Med* 1945;45:1097-1100.
51. Schwartz K, d'Arcy H, Gillespie B, et al. Factors associated with weaning in the first 3 months postpartum. *J Fam Pract* 2002;51(5):439-444.
52. Duffy E, Percival P, Kershaw E. Positive effects of an antenatal group teaching session on postnatal nipple pain, nipple trauma and breastfeeding rates. *Midwifery* 1997;13(4):189-196.
53. Henderson A, Stamp G, Pincombe J. Postpartum positioning and attachment education for increasing breastfeeding: a randomized trial. *Birth* 2001;28(4):236-242.
54. Smith W, Erenberg A, Nowak A, Franken J. Physiology of sucking in the normal term infant using real-time US. *Radiology* 1985;156:379-381.
55. Hogan M, Westcott C, Griffiths M. Randomized, controlled trial of division of tongue-tie in infants with feeding problems. *J Paediatr Child Health* 2005;41(5-6):246-250.
56. Griffiths D. Do tongue ties affect breastfeeding? *J Hum Lact* 2004;20(4):409-414.
57. Coryllos E, Watson G, Salloum AC. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. Newsletter of the American Academy of Pediatrics, section of breastfeeding. Disponible en www.aap.org/breastfeeding/8-27%20newsletter.pdf.
58. Catlin FI, De Haan V. Tongue-tie. *Arch Otolaryng* 1971;94:548-557.
59. Warden PJ. Ankyloglossia. A review of the literature. *Gen Dent* 1991;39:252-253.
60. Fiorotti RC, Bertolini MM, Nicola JH. Early lingual frenectomy assisted by CO2 laser helps prevention and treatment of functional alterations caused by ankyloglossia. *Int J Orofacial Myology* 2004;30:64-71.
61. Coryllos E, Genna C, Salloum A. Congenital tongue-tie and its impact on breastfeeding. *Breastfeeding: Best for Mother and Baby* 2004;1-6.
62. Kupietzky A, Botzer E. Ankyloglossia in the infant and young child: clinical suggestions for diagnosis and management. *Pediatr Dent* 2005;27(1):40-46.
63. Gray SD, Parkin JL. Congenital malformations of the mouth and pharynx. En: Bluestone CD, Stool SE, Kenna MA (eds.) *Pediatric Otolaryngology*, 3rd ed. Philadelphia: WB Saunders Co; 1996:989-991.
64. Li HM, Kang B, Lin JB, et al. Use of Z plasty for ankyloglossia: report of 38 cases. *Shanghai Kou Qiang Yi Xue* 2005;14(2):203-204.
65. Mathewson R, Siegel M, McCanna D. Ankyloglossia: a review of the literature and a case report. *J Dent Child* 1966;33:238-243.
66. Naimer SA, Biton A, Vardy D, et al. Office treatment of congenital ankyloglossia. *Med Sci Monit* 2003;9(10):CR432-435.